

## Anal kanal duplikasyonu: Vaka sunumu ve literatüre genel bakış

### Anal canal duplication: Case report and literature review

Hüseyin Kılınçaslan<sup>1</sup>, İbrahim Aydoğdu<sup>1</sup>, Tuğrul Dönmez<sup>2</sup>

1 Bezmialem Vakıf Üniversitesi, Tıp Fakültesi, Çocuk Cerrahisi Anabilim Dalı, İstanbul, Türkiye

2 Bezmialem Vakıf Üniversitesi, Tıp Fakültesi, Çocuk Sağlığı Ve Hastalıkları Anabilim Dalı, İstanbul, Türkiye

#### Özet

Anal kanal duplikasyonu (AKD) nadir bir gastrointestinal anomalidir. Biz burada yeni bir olgu sunumu eşliğinde literatürde ki AKD hastalarını klinik özellikler, tanı ve tedavi yaklaşımları açısından gözden geçirmeyi amaçladık.

#### Abstract

Anal canal duplication (ACD) is a rarely seen gastrointestinal anomaly. We aimed to review the clinical features, diagnostic assessment and treatment approach in ACD patients in association with a case presented by us.

**Anahtar Kelimeler:** Anal kanal, anal kanal duplikasyonu, literatüre bakış

**Keywords:** Anal canal, anal canal duplication, literature review

#### Giriş

Anal kanal duplikasyonu (AKD) normal anüsün posteriorunda yerleşmiş, gerçek anal kanal ile çoğunlukla bağlantı göstermeyen, ikincil bir anal orifis olarak tanımlanabilir. Sindirim sistemi duplikasyonlarının en nadir görülenidir. Çoğunlukla son barsağa ait başka bir patoloji bu anomaliye eşlik etmez. Genellikle semptom vermezler ve hastalar ailelerin dikkatini çekerek kliniklere getirilirler. Tubuler, kistik ve intramural olmak üzere üç tipi vardır. Kızlarda daha sık görülür ve şüphelenildiğinde basit bir inspeksiyon ile tanı konulabilir. Tanı aşamasında hemoroid, perianal fistül ve perianal abse gibi diğer anorektal patolojilerle karışabilir.

AKD'nun muhtemel malignite gelişimi, fistül ve abse oluşumu nedeniyle erken dönemde cerrahi olarak çıkarılması gerekir (1,2,3). Burada yeni bir AKD vakasını sunduk ve literatürde ki hastaları klinik karakteristikleri, cerrahi bulguları ve sonuçları açısından inceledik. Bir yaşında ki kız hasta polikliniğimize kabızlık şikayeti ile getirildi. Fizik muayenede karında şişlikle beraber, anüs posteriorunda orta hatta aksesuar anal orifis tespit edildi (Resim 1). Kontrast madde verilerek çekilen grafide anüs posteriorunda, 15 mm uzunluğunda AKD tespit edildi. Bu yapının normal anal kanalla bağlantısı yoktu. AKD posterior-sagittal yaklaşımla bir nelaton sonda kullanılarak kateterize edildi. Bu sondanın rehberliğinde orifisinden yapılan çepeçevre

insizyonla serbestleştirilerek total olarak eksize edildi (Resim 2).

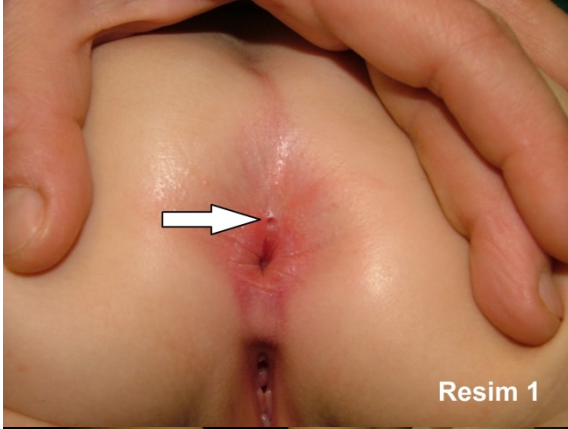
Histopatolojik inceleme transizyonel ve çok katlı epitel içerir. Tubuler doku parçası olarak sonuçlandı. Hastanın operasyon sonrası bir yıllık takibinde sorunla karşılaşmadı.

Pubmed'de "anal canal duplication" ve "anal duplication" terimleri ile arama yapılarak AKD'lu hasta serilerine ulaşıldı. Mevcut vaka sunumları ve derleme yazıları bizim vakamızla birleştirildi.

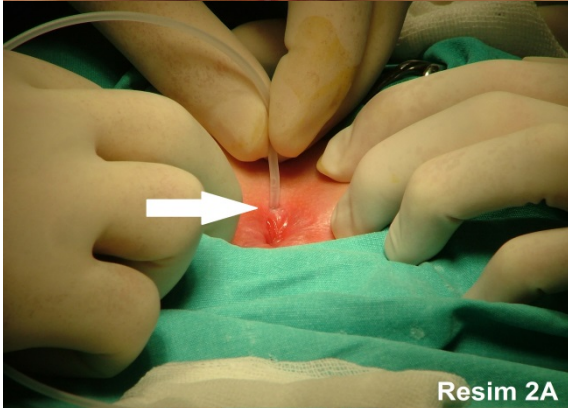
Vakamızın da eklenmesiyle toplam 50 hastanın raporları birleştirildi. Hastaların 45'ü kızdı (%90) ve 5'i erkekti. Tanı anında ki ortalama yaş 28,3 aydı (1 gün-15 yaş). Hastaların %64'ünün (n=32) yaşı ≤1'di. Yirmi-iki hastada (%44) tanı rastlantısal olarak konulurken, kabızlık 13 (%26) hasta da ise en sık şikayetti. Diğer hastalarda ise anal ağrı, anal kaşıntı, abse, perineal erozyon, tekrarlayan fistül ve karın ağrısı gibi şikayetler mevcuttu. İkinci orifis 47 hastada (%94) posteriorda iken, 1 hastada anteriorda, 1 hastada lateraldeydi. Bir hastada ise orifisin yeri tarif edilmemişti. Duplikasyonlar yapısal özellik açısından değerlendirildiğinde, % 90'ının tubuler, % 6'sının kistik olduğu ve % 4'ünde ise yapının tarif edilmediği görüldü. Hastaların %26'sında (n=13) duplike anüsün uzunluğu bilgisine ulaşılamadı. Geri kalan 37 hastada



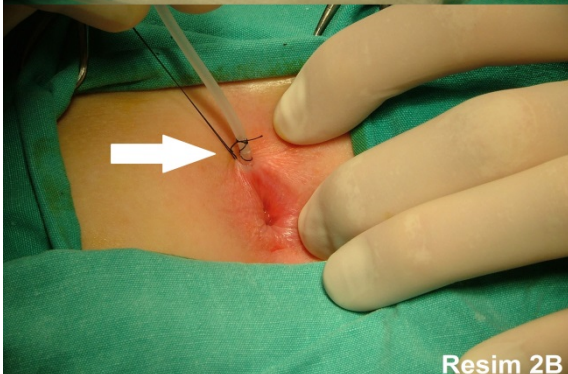
ortalama AKD uzunluğu 18,8 (5-50) mm idi. Hastaların %66'inde (n=33) ek anomaliye rastlanmazken, diğerlerinde ise hipoplastik böbrek (n=1), anal darlık (n=2), sakrokoksigeal kitle (n=6), sakral meningoel (n=1), yarı damak (n=2), üreterik duplikasyon (n=1), penil duplikasyon (n=1), malrotasyon (n=1), spina bifida (n=1) ve anorektal malformasyon (n=1) mevcuttu. AKD, hastaların %78'inde (n=39) perineal ve posterior sagittal yaklaşımla çıkarıldı, 2 hasta operasyonu reddetti, 1 hasta operasyon öncesi aşamada enfeksiyöz ishale bağlı eksitus oldu, 3 hastada mukozektomi, 3 hastada transanal yolla eksizyon uygulandı. İki hastanın ise operasyon kaydına ulaşamadı. Tablo 1'de tüm hastaların bilgileri verilmiştir (1-13). Tablo 2'de ise AKD hastalarının sınıflaması yapılmıştır.



Resim 1



Resim 2A



Resim 2B

## Tartışma

Anal kanal duplikasyonu nadir bir konjenital anomalidir ve normal anüse ek olarak bir anüs daha mevcuttur. İlk olarak 1956'da tanımlanmıştır. Etiyolojisi tam olarak bilinmemektedir. Fetal gelişimin erken safhasında oluşan dorsal bir kloakal anomali olduğu düşünülmektedir (1-4). Etiyolojisini açıklamaya yönelik diğer bir görüş ise rekanalizasyon teorisi ile açıklanmaya çalışılmıştır (7). Fetal gelişimin geç safhasında, normalden daha uzun dorsal kloakal membrana sahip fetüslerde ki rekanalizasyon duplike anüsle sonuçlanmaktadır. AKD genellikle asemptomatiktir ve ikinci orifis rastlantısal olarak bulunur. Bir kısmında ise kabızlık, anal ağrı ve karın ağrısı gibi non-spesifik semptomlar mevcuttur. AKD'lu vakaların semptomatik olma olasılığı yaşla beraber artmaktadır. Bazıları ise duplike yapının enfekte olması sonrası sepsise kadar giden bulgular ile başvurabilir. Bu yüzden erken safhada tanısının konulması önemlidir. Erken tanı hem bu komplikasyonları engelleyecektir hem de yanlış tanıları sonucu olan gereksiz zaman kayıplarının önüne geçecektir. AKD vakalarının çoğunluğu 1 yaş ve altı çocuklardır. Tanıda en önemli noktalardan biri özellikle çocuk hastalarla uğraşan hekimlerce bu nadir anomalinin özelliklerinin bilinmesi ve bu patolojiden şüphelenilmesidir. Tanıyı koymak için inspeksiyon çoğunlukla yeterlidir. Bazen de genel anestezi altında duplike orifisten metal kateter ileletilmesi de tanıya yardımcı olabilir. Baryumlu kontrastlı grafilerle tanı doğrulanır, duplike yapının uzunluğu ve normal anüsle bağlantısı ortaya konulur. Ayrıca kistik-tubuler ayrımı da yapılır. Ayırıcı tanıda perianal fistül, abse, rektal duplikasyon ve presakral kitleler düşünülmelidir. Bunlardan rektal duplikasyon çoğunlukla anteriorda olması ve kitle oluşturması ile AKD'ndan ayrılır. Perianal fistül ise çoğunlukla orta hatta yerleşmeyen bir lezyondur. Ek anomalileri tespit etmek ve ayırıcı tanı amacıyla, ultrasonoğrafi, bilgisayarlı tomografi veya magnetik rezonans görüntülemeleri gerekebilir.

Literatürdeki AKD hastalarının büyük bir çoğunluğu kızdır. Bu seks kromozomu ile ilişkili genetik faktörleri akla getirmektedir fakat bu durum tam olarak aydınlatılamamıştır. Duplike anüs çoğunlukla normal anüsün posteriorunda yer-

leşmiştir, tubuler yapıdadır ve normal anüsle bağlantısı yoktur. Anteriorda veya lateralde yerleşmiş; kistik yapıda ve anüsle bağlantısı olan vakalarda bildirilmiştir (9-11, 13). AKD'nda kesin tanı histopatolojik inceleme ile konulur. Burada lezyonun proksimal ucunda transizyonel epitelin, distal ucunda ucunda çok katlı yassı epitelin ve duvarında düz kas hücrelerinin görülmesi esastır (14).

Tedavinin esasını cerrahi eksizyon oluşturur. Eksizyon; fistül, presakral kitle ve erişkin yaşlarda oluşabilecek malignite (15) gibi komplikasyonları önler. Cerrahi yaklaşımın tipini lezyonun büyüklüğü ve anal kanalla ilişkisi belirler (2). Eğer AKD <3 cm ise ve normal anal kanalla bağlantısı yoksa perineal yaklaşım ile çok iyi sonuçlar elde edilir. AKD > 3 cm, sakruma doğru uzanıyorsa, normal anal kanalla bağlantılı ise, presakral kitle veya apse oluşturmuşsa posterior sagittal yaklaşım idealdir. Bazı vakalarda ise operasyon sonrası anal sfinkter ile ilgili komplikasyonları en aza indirmek için sadece mukozektomi yapılması ve geri kalan tubuler yapının kendi üzerine kapatılması önerilmiştir. Tiryaki ve ark. (8) mukozektomiyi kolay uygulanabilmesi nedeniyle diğer tekniklere alternatif olarak önermişlerdir. Malignite ve enfeksiyon gelişimi mukozadaki salgı bezleri ile ilgilidir. Dolayısı ile bu yaklaşım tarzının bu riskleri ortadan kaldırmaya yeterli olduğu vurgulanmıştır (11).

Sonuç olarak, AKD nadir fakat enfeksiyon ve malignite gibi komplikasyonlara neden olabilen bir anomalidir. Anüs posteriorunda orta hatta ikinci bir orifis görüldüğünde AKD'dan şüphelenilmelidir. Kontrastlı grafi ile tanısı kesinleştirildikten sonra vakit kaybedilmeden cerrahi olarak eksize edilmelidir. Operasyon sonrası sonuçları mükemmeldir.

### **Kaynaklar**

1. Narci A, Dilek FH, Cetinkurşun S. Anal canal duplication. *Eur J Pediatr* 2010;169(5):633-5.
2. Koga H, Okazaki T, Kato Y, Lane GJ, Yamataka A. Anal canal duplication: experience at a single institution and literature review. *Pediatr Surg Int* 2010;26:985-8.

3. Ponson AE, Festen C. Postanal sinus: single or different etiologies? *Pediatr Surg Int* 2001;17:45-7.
4. Hamada Y, Sato M, Hiroki K. Anal canal duplication in childhood. *Pediatr Surg Int* 1996;11:577-9.
5. Jacquier C, Dobremez E, Piolat C, Dyon JF, Nugues F. Anal canal duplication in infants and children—a series of 6 cases. *Eur J Pediatr Surg* 2001;11:186-91.
6. Ochiai K, Umeda T, Murahashi O, Sugitoh T. Anal-canal duplication in a 6-year-old child. *Pediatr Surg Int* 2002;18:195-7.
7. Choi SO, Park WH. Anal canal duplication in infants. *J Pediatr Surg* 2003;38:758-62.
8. Tiryaki T, Senel E, Atayurt H. Anal canal duplication in children: a new technique. *Pediatr Surg Int* 2006;22:560-1.
9. Lisi G, Illiceto MT, Rossi C, Broto JM, Jil-Vernet JM, Lelli Chiesa P. Anal canal duplication: a retrospective analysis of 12 cases from two European pediatric surgical departments. *Pediatr Surg Int* 2006;22:967-73.
10. Carpentier H, Maizlin I, Bliss D. Anal canal duplication: case reviews and summary of the world literature. *Pediatr Surg Int* 2009;25:911-6.
11. Lippert SJ, Hartin CW Jr, Ozgediz DE. Communicating anal canal duplication cyst in an adolescent girl. *Colorectal Dis* 2012;14:e270-1.
12. Sinnya S, Curtis K, Walsh M, Wong D, Kimble R. Late presentation of anal canal duplication in an adolescent female—a rare diagnosis. *Int J Colorectal Dis* 2013;28:1175-6.
13. Bakheet MA, Refaei M. Penile duplication and two anal openings; report of a very rare case. *Iran J Pediatr* 2012;22:133-6.
14. Nievelstein RA, van der Werff JF, Verbeek FJ, Valk J, Vermeij-Keers C. Normal and abnormal embryonic development of the anorectum in human embryos. *Teratology* 1998 ;57:70-8.
15. Dukes CE, Galvin C. Colloid carcinoma arising within fistulae in the anorectal region. *Ann R Coll Surg Engl* 1956;18:246- 61.



Tablo 1: Literatürdeki AKD'lu vakaların özellikleri görülmektedir.

Vaka	Yaş	E:erkek K:kız	Klinik özellik şikayet	Normal anüse göre yerleşim	Uzunluk (mm)	Tip	Anal ilişkisi	kanal	Eşlik anomali	eden	Cerrahi yaklaşım tipi
1 (1)	9	yaş	K	Rastlantısal Bulgu	Posterior	20	Tubuler	Yok	Yok		Perineal
2 (1)	1	yaş	K	Rastlantısal Bulgu	Posterior	15	Tubuler	Yok	Yok		Perineal
3 (2)	1	ay	K	Kabızlık	Posterior	20	Tubuler	Yok	Yok		Posterior Sagittal
4 (2)	4	yaş	K	Kabızlık	Posterior	35	Tubuler	Yok	Hipoplastik Böbrek		Perineal
5 (2)	8	Ay	K	Kabızlık	Posterior	10	Tubuler	Yok	Anal Darlık		Perineal
6 (2)	4	yaş	K	Kabızlık	Posterior	20	Tubuler	Yok	Yok		Perineal
7 (2)	1	ay	K	Kabızlık	Posterior	15	Tubuler	Yok	Anal Darlık		Perineal
8 (2)	2	ay	K	Menenjit	Posterior	20	Tubuler	Yok	Presakral Teratom		Perineal
9 (2)	1	ay	K	Kabızlık	Posterior	30	Tubuler	Yok	Yok		Perineal
10 (2)	10	ay	K	Yok	Posterior	30	Tubuler	Yok	Yok		Perineal
11 (2)	7	ay	K	Kabızlık	Posterior	20	Tubuler	Yok	Yok		Perineal
12 (2)	1	yaş	K	Kabızlık	Posterior	15	Tubuler	Yok	Yok		Perineal
13 (3)	1	yaş	K	Yok	Posterior	20	Tubuler	Yok	Yok		Transanal
14 (3)	4	yaş	K	Anal Ağrı	Posterior	15	Tubuler	Yok	Yok		Transanal
15 (3)	10	ay	K	Anal Ağrı	Posterior	20	-	Yok	Yok		Transanal
16 (4)	7	ay	K	Perineal erozyon	Posterior	11	Tubuler	Yok	Yarık dudak		Perineal
17 (4)	6	yaş	K	Rastlantısal Bulgu	Posterior	10	Tubuler	Yok	Yok		Perineal
18 (5)	3	ay	K	Rastlantısal Bulgu	Posterior	30	Tubuler	Yok	Sakrokoksigeal Teratom		Perineal
19 (5)	1	ay	K	Rastlantısal Bulgu	Posterior	10	Tubuler	Yok	Yok		Perineal
20 (5)	1	gün	K	Rastlantısal Bulgu	Posterior	25	Tubuler	Yok	Yok		Perineal
21 (5)	12	yaş	K	Karın ağrısı, ishal	Posterior	30	Tubuler	Yok	Üreterik Duplikasyon		Perineal
22 (5)	1	gün	E	Rastlantısal Bulgu	Posterior	10	Tubuler	Var	Malrotasyon		Perineal
23 (5)	3	yaş	K	Rastlantısal Bulgu	Posterior	10	Tubuler	Yok	Sakrokoksigeal Teratom		Perineal
24 (6)	6	yaş	K	Anal Kaşıntı	Posterior	5	Tubuler	Yok	Yok		-
25 (7)	4	ay	K	Rastlantısal Bulgu	Posterior	12	Tubuler	Yok	Yok		Posterior Sagittal
26 (7)	4	ay	K	Rastlantısal Bulgu	Posterior	12	Tubuler	Yok	Yok		Posterior Sagittal
27 (7)	4	ay	K	Rastlantısal Bulgu	Posterior	12	Tubuler	Yok	Yok		Posterior Sagittal
28 (7)	3	ay	K	Rastlantısal Bulgu	Posterior	10	Tubuler	Yok	Yok		Posterior Sagittal
29 (7)	3	ay	K	Rastlantısal Bulgu	Posterior	10	Tubuler	Yok	Yok		Posterior Sagittal



*Kılınçaslan ve ark.*

30 (7)	9	ay	K	Rastlantısal Bulgu	Posterior	-	Tubuler	Yok	Yok	Operasyonu reddetti
31 (8)	7	yaş	K	-	Posterior	30	-	Yok	Yok	Mukozektomi
32 (8)	7	yaş	K	Karın Ağrısı	Posterior	20	Tubuler	Yok	Sakral Meningosel	Mukozektomi
33 (9)	8	yaş	K	Kabızlık	Anterior	-	Tubuler	Var	Yok	Posterior Sagittal veya Perineal
34 (9)	1	gün	K	Rastlantısal Bulgu	Posterior	-	Tubuler	Yok	Yok	Posterior Sagittal veya Perineal
35 (9)	1	gün	K	Rastlantısal Bulgu	Posterior	-	Tubuler	Yok	Yok	Posterior Sagittal veya Perineal
36 (9)	3	yaş	K	Rekürren Fistül	Posterior	-	Tubuler	Yok	Yok	Posterior Sagittal veya Perineal
37 (9)	1	gün	K	Rastlantısal Bulgu	Posterior	-	Tubuler	Yok	Yarık Dudak	Posterior Sagittal veya Perineal
38 (9)	3	yaş	K	Rastlantısal Bulgu	Posterior	-	Tubuler	Yok	Presakral Kitle	Posterior Sagittal veya Perineal
39 (9)	3	yaş	K	Rekürren Fistül	Posterior	-	Tubuler	Var	Yok	Posterior Sagittal veya Perineal
40 (9)	1	yaş	K	Kabızlık	Posterior	-	Tubuler	Yok	Presakral Kitle	Posterior Sagittal veya Perineal
41 (9)	3	ay	K	Rastlantısal Bulgu	Posterior	-	Tubuler	Yok	Presakral Kitle	Posterior Sagittal veya Perineal
42 (9)	2	yaş	K	Rastlantısal Bulgu	Posterior	-	Tubuler	Yok	Yok	Posterior Sagittal veya Perineal
43 (9)	5	yaş	E	Kabızlık	Posterior	-	Tubuler	Yok	Yok	Operasyonu reddetti
44 (9)	2	yaş	K	Rastlantısal Bulgu	-	-	Kistik	Yok	Anorektal Malformasyon	Posterior Sagittal
45 (10)	3	ay	K	Abse	Posterior	50	Kistik	Yok	Spina Bifida	Perineal
46 (10)	2	ay	E	Kabızlık	Posterior	10	Tubuler	Yok	Yok	Perineal
47 (11)	12	yaş	K	Rektal Ağrı	Posterior	40	Kistik	Var	Yok	Mukozektomi
48 (12)	15	yaş	K	Anal Ağrı	Posterior	15	Tubuler	Yok	Yok	-
49 (13)	21	gün	E	Rastlantısal Bulgu	Lateral	12	Tubuler	Yok	Penil Duplikasyon	Operasyon öncesi ex
50(Vakamız)	1	yaş	K	Kabızlık	Posterior	15	Tubuler	Yok	Yok	Posterior Sagittal



<b>Tablo 2: Literatüre genel bakış</b>	
<b>Vaka sunumları</b>	50
<b>Cinsiyet</b>	
Kız	45 (%90)
Erkek	5 (%10)
<b>Yaş dağılımı</b>	
≤ 1 yaş	32 (%64)
>1 yaş	18 (%36)
<b>AKD'nun normal anüse göre yeri</b>	
Posterior	47 (%94)
Anterior	1 (%2)
Lateral	1 (%2)
Yeri belirtilmeyen	1 (%2)
<b>Tanı anında şikayet, tanının nasıl konulduğu</b>	
Rastlantısal	22 (%44)
Kabızlık	13 (%26)
Anal ağrı-fistül-kaşıntı-abse	7 (%14)
Diğer (karın ağrısı, ishal, menenjit)	8 (%16)
<b>Duplikasyon tipi</b>	
Tubuler	45 (%90)
Kistik	3 (%6)
Belirtilmeyen	2 (%4)
<b>Eşlik eden anomali</b>	
Var	17 (%34)
Yok	33 (%66)
<b>Cerrahi yaklaşım tipi</b>	
Perineal- posterior sagittal yaklaşımla total eksizyon	39 (%78)
Mukozektomi	3 (%6)
Transanal yaklaşımla total eksizyon	3 (%6)
Belirtilmeyen, opere edilmeyen	5 (%10)

